



TITLE:

多嚔丸症の1例

AUTHOR(S):

森山, 正敏; 井田, 時雄

---

CITATION:

森山, 正敏 ...[et al]. 多嚔丸症の1例. 泌尿器科紀要 1981, 27(11): 1399-1403

ISSUE DATE:

1981-11

URL:

<http://hdl.handle.net/2433/123235>

RIGHT:

## 多 睾 丸 症 の 1 例

国立熱海病院泌尿器科 (医長: 井田時雄博士)

森 山 正 敏 ・ 井 田 時 雄

POLYORCHISM: A CASE REPORT AND REVIEW  
OF THE LITERATURE

Masatoshi MORIYAMA and Tokio IDA

*From the Department of Urology, Atami National Hospital (Chief: T. Ida, M.D.)*

A case of the polyorchism was herein reported. A 32-year-old man was admitted to the hospital because of terminal pain on urination and right inguinal pain. Physical examination revealed two masses in the right side of the scrotum. At operation the scrotum was opened, and two masses were identified as small testes. The size of the upper testis was  $19 \times 16 \times 15$  mm, and that of the lower testis  $23 \times 20 \times 20$  mm. Biopsies disclosed hyalinized seminiferous tubules with little spermatogenesis and normal appearing epididymis. The 10 cases including our case, compiled from the Japanese literature, were reviewed and some discussion was done.

**Key words:** Polyorchism, Spermatogenesis, Urogenital ridge, Wolffian duct

## 緒 言

泌尿生殖器系においては複雑な発生過程を経るため先天異常が生じる場合が多い。睾丸に関しては数・形態・位置などの異常が存在するが、3個以上存在する場合を多睾丸症 polyorchism という<sup>1)</sup>。最近われわれは本症の1例を経験したので報告する。

## 症 例

患 者: F.W. 32歳。会社員。

初 診: 1980年9月1日。

主 訴: 排尿終末時痛および右鼠径部痛。

家族歴: 同胞に奇型を有するものはない。離婚歴あり。子供はない。

既往歴: 12年前交通事故にて腓骨骨折で3回手術施行。1979年右副睾丸炎にて加療。

現病歴: 1980年8月下旬より上記症状出現し右副睾丸炎疑にて化学療法施行するも変化なく、1980年10月8日精査治療目的にて入院。

現 症: 体格・栄養中等度。胸腹部に異常所見なし。外陰部では面側睾丸ともに小さく陰茎龟头尿道下裂を同時に認める。右副睾丸頭部に副睾丸とは異なる可動性良好な小豆大の腫瘤を触知する。

入院時検査成績: 血液所見 RBC  $537 \times 10^4 / \text{mm}^3$ ,

Hb 17 g/dl, Ht 52%, WBC  $8000 / \text{mm}^3$ , 血液像正常。血液生化学: 総蛋白 7.2 g/dl, BUN 21 mg/dl, Cr 1.04 mg/dl, GOT 19 mu/ml, GPT 21 mu/ml, ALP 114 mu/ml, LDH 278 mu/ml, Na 142 mEq/L, K 4.1 mEq/L, Cl 101 mEq/L, 赤沈値 1時間値 1 mm, 2時間値 3 mm 尿所見: 糖 (-), 蛋白 (-), RBC 0-1/毎視野, WBC 2-3/毎視野, 細胞 1~2/毎視野, 円柱 (-), 細菌 (-), pH 6, 比重 1.017。胸部X線・心電図に異常所見なし。腎機能検査: 24時間内因性クレアチニンクリアランス 123 L/day。

X線検査: 排泄性腎盂造影にて上部尿路に異常所見なく逆行性尿道造影にても異常所見を認めない。

手術所見: 1980年10月13日腰椎麻酔下に腫瘍摘除術施行。右陰嚢に切開を加え直視下に睾丸を観察するに、睾丸を2個認めた。下位睾丸は  $23 \times 20 \times 20$  mm で長い副睾丸が存在し精管へつながっていた。上位睾丸は  $19 \times 16 \times 15$  mm で副睾丸・精管ともに存在しなかった (Fig. 1, 2)。上位睾丸を切除し下位睾丸および副睾丸より生検を施行し陰嚢内へ返納した。右鼠径ヘルニアも存在していたためヘルニア嚢も同時に処理した。左側睾丸は  $35 \times 23 \times 20$  mm であった。

病理組織学的所見: 切除した上位睾丸および生検した下位睾丸ともに萎縮し、精細管の約半分は完全に硝子化していた。他は萎縮しているが辛じて精子形成能

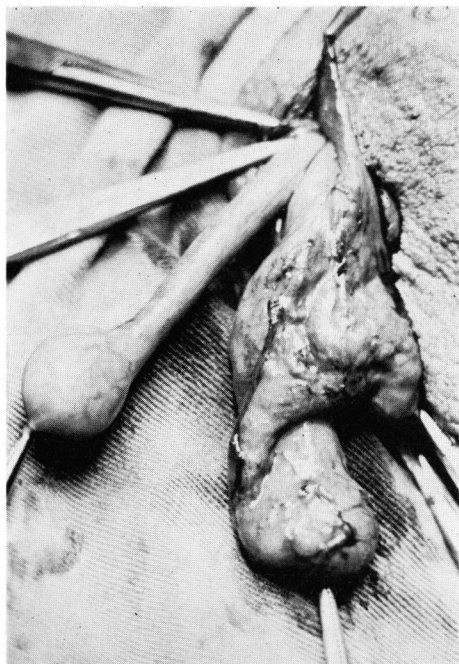


Fig. 1. Operative photograph

を保っていた。Leydig cell はやや過形成傾向にあった (Fig. 3)。なお副睾丸組織は正常像を呈していた (Fig. 4)。

術後の検査成績：精囊腺造影にて精管の拡張および

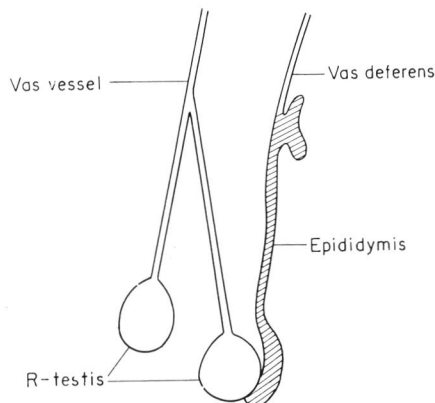


Fig. 2. Schematic drawing of operative findings

精囊腺結石を認めた。内分泌学的検査にて血漿テストステロン 4.11 ng/ml, 血清 LH 25.5 mIU/ml, 血清 FSH 31.0 mIU/ml で正常範囲内であった。

精液検査：液量 2.3 ml, 精子数  $24.6 \times 10^6$ /ml, 運動率50%, 奇形率25%で精子数の減少を認めた。

染色体検査：末梢血のリンパ球培養にて 46 XY であった。

術後経過：術後経過は良好で特に問題なく、1980年11月5日退院となった。

## 考 察

3 個以上の睾丸が存在する場合を多睾丸症 (polyor-

Table 1. 組織学的に確認された多睾丸症の本邦報告例

報告者	年度	年齢	主 訴	側	副睾丸	精管	精子形成	形態	処 置
1 奈良米吉	1924	37	左陰囊内腫瘍	L	(+) (+)	(-) (+)	(-)	II	除睾丸 返納
2 "	"	22	右陰囊内無痛性腫瘍	R	(+) (+)	(+) (+)	(+)	I	除睾丸 返納
3 松岡幸七 ・ほか	1941	9	排尿時陰囊鈍痛 睾丸腫脹および圧痛	L					除睾丸
4 梅津隆子 ・ほか	1971	不明	左陰囊内睾丸 触知不能	L	(+) (-)	(+) (+)		III	睾丸固定術 除睾丸
5 寛 英雄 ・ほか	1972	28	右睾丸痛	R	(+) (+)	(+) (+)	(+) (+)	V	睾丸生検・返納 } 陰嚢水腫 睾丸生検・返納 } 根治術
6 豊田 泰 ・ほか	1974	24	左側腹部痛 腰痛	L	(+) (+)	(+) (+)	(+) (+)	V	睾丸生検・返納 睾丸生検・返納
7 安井平造 ・ほか	1976	12	尿道異常開口	L	(+) (+)	(+) (+)	(+) (-)	VI	睾丸生検・返納 } 陰茎形成術 除睾丸
8 藤岡良彰 ・ほか	1978	21	右鼠径部腫瘍 尿道異常開口	R	(+) (+)	(+) (+)		V	除睾丸 除睾丸 } 尿道形成術
9 三橋裕行 ・ほか	1980	14	左陰嚢部間歇的疼痛	L	(+) (+)		maturation arrest		睾丸生検・睾丸固定術 除睾丸
10 自 験 例	1981	32	排尿終末時痛 右鼠径部痛	R	(-) (+)	(-) (+)	(+) (+)	VI	除睾丸 睾丸・副睾丸生検・返納



Fig. 3. Histological appearance of testis

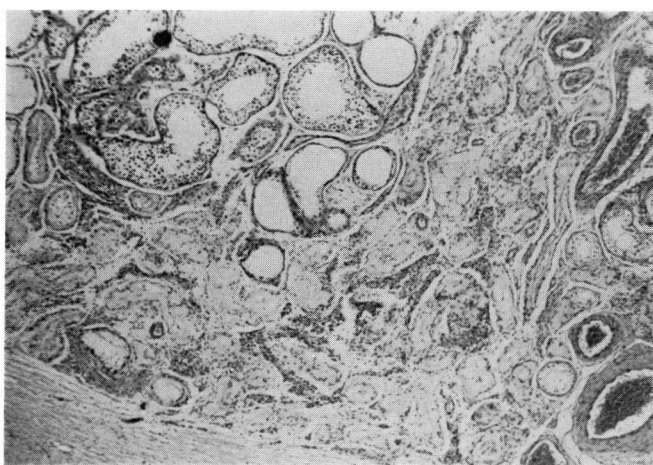


Fig. 4. Histological appearance of epididymis

chism) という。本症の第1例目は1670年の Blasius<sup>2)</sup>の報告または1880年の Ahlfeld<sup>3)</sup>の報告ともいわれている。その後かなりの報告例<sup>4-6)</sup>をみるか、1928年 Edington and Blacklock<sup>7)</sup>は組織学的に睾丸と確認された場合のみ polyorchism というべきだと述べている。本邦報告例は1974年豊田ら<sup>8)</sup>が6例を集計しているが、その後の症例<sup>9-11)</sup>および自験例を加えて10症例を今回集計しえた (Table 1)。

男子性腺の発生は胎生5週ころ原始体腔の背側腸間膜の両側において腹膜の皺壁肥厚というかたちで尿生殖隆起 (urogenital ridge) が発生するところより始まる。6週ころ尿生殖隆起は2分し、正中側は生殖隆起 (genital ridge) に、外側は原腎隆起 (mesonephric ridge) となる。その後それぞれ増殖分化し前者からは性腺、後者からは原腎 (中腎 mesonephros) が発生

する。生殖隆起は表層の皮質と内層の髄質構造を示している。生殖隆起の表面の腹膜上皮は増殖して生殖上皮 (germinal epithelium) となり第一次皮質を形成するが、生殖上皮は集団となり下方の間葉系細胞の網状構成から成る第一次髄質内にも進入し第一次生殖索を形成する。7週ころには、睾丸となるべき個体においては性索細胞集団は増殖・分岐を繰り返し索状構造を示す睾丸索 (testis cord) を形成、将来は精細管に発展してゆく。他方、表層に残存する生殖上皮層は萎縮し、結合織性となり白膜を形成する。睾丸索をとりまく間葉系細胞から間細胞および間質が分化する。胎生9週ころは睾丸原基に隣接する原腎組織内に原腎尿管 (mesonephric duct) が残存している。睾丸原基の発育・分化につれ下部のものは次第に萎縮し胎生4～5ヵ月ころには残存した上部の原腎尿管が睾丸網と

吻合するようになる。すなわち、原腎の集合管が睪丸輸尿管 (ductus efferentis) となり精細管からの輸送をうけつ。原腎の排泄管として残存していた原腎管 (Wolffian duct) はこれにつれ変化し副睪丸管 (ductus epididymis), 精管 (ductus deferens) および射精管 (ductus ejaculatorius) に分化する。生殖管 (Müllerian duct) は睪丸発育過程に伴い退行変性し、頭側部が睪丸頭部に残存し睪丸附着体 (appendix testis) となるにすぎない。

臨床に存在する多睪丸症例は多彩な形態を示すが、Wilson and Littler<sup>12)</sup> は3型に分類した。

- 1): 正常睪丸と副睪丸・精管を欠く睪丸
- 2): 正常睪丸と副睪丸は有するが精管を欠く睪丸
- 3): 両睪丸とも副睪丸を有し、精管を共有するもの

しかし、これだけでは分類できない場合もあり、豊田ら<sup>8)</sup> は6型に分類することを提唱した。すなわち、

第I型: 精管・副睪丸・睪丸を重複するもの

第II型: 重複する一方が副睪丸・睪丸のみで精管を有しないもの

第III型: 重複する一方が睪丸・精管のみで副睪丸を有しないもの

第IV型: 重複する一方が睪丸のみで副睪丸・精管を有しないもの

第V型: 重複する睪丸が副睪丸により連結され、これにつづく1本の精管を有するもの

第VI型: 重複する睪丸・副睪丸が1本の精管に連結されているもの (Fig. 5)。

われわれの症例はこの分類によれば第VI型に属すると考えられる。

発生原因: Wilson and Littler<sup>12)</sup> は1) 生殖隆起の

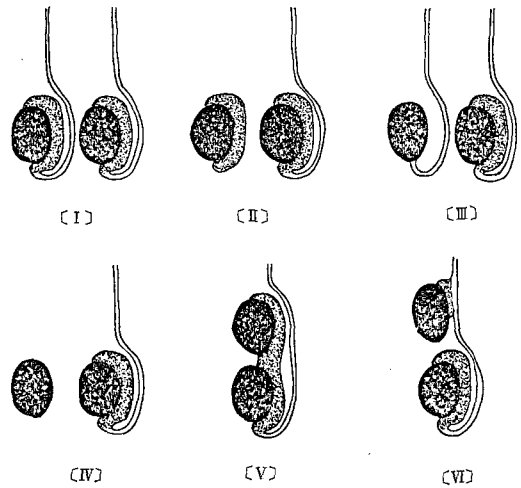


Fig. 5. Schematic representation of polyorchism classification

重複, 2) 原腎の部分退化, 3) 腹膜帯 (peritoneal bands) による生殖隆起の分割の3説があるが、横分割が生殖隆起や原腎尿細管・原腎管のいろいろな部に起こって形態の多様化が生れるという説をとっている。しかし、これでも充分説明できない場合もあり、一説ではなかなか説明できないようである。また、Nocks<sup>13)</sup> は1) 生殖隆起の重複, 2) 生殖隆起の横分割の2つの場合を考えた。1) の場合には正中側の生殖隆起は原腎管よりの連結はなく, 2) の場合には原腎尿細管の存在する部分で横分割が起これば上位・下位睪丸ともに精子形成能は存在するが、原腎尿細管より下位で横分割が起こった場合は下位睪丸に精子形成能はないとした (Fig. 6)。

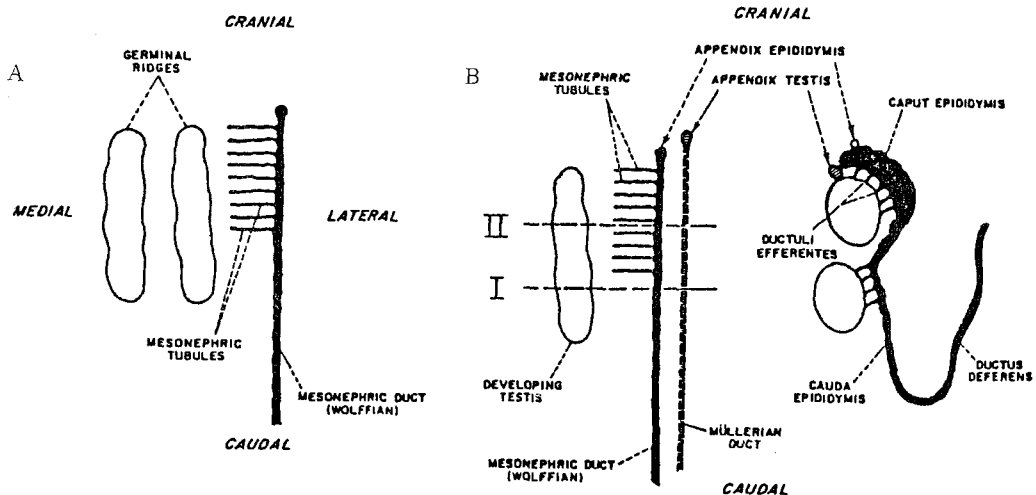


Fig. 6. Schematic drawing of genital ridge

診断：確定診断は組織学的になされるが、触診にて片側陰嚢内に腫瘍を2個触知するものは一応本症を考える。

鑑別疾患：精索嚢腫、副睾丸腫瘍、また、他側に睾丸を触知しなければ交叉性睾丸転移も鑑別する。

合併症：本症自体は無症状の場合がほとんどであるため合併症にて発見される場合が多い。精索捻転症、鼠径ヘルニア、停留睾丸、陰嚢水腫、副睾丸炎、男子不妊症、尿道下裂などがある。

精子形成能：精子形成能は低下しているのが普通だが、正常あるいは形成能ありというのは Goldstein ら<sup>14)</sup>、Wescott ら<sup>15)</sup>、Corwin ら<sup>16)</sup>、Smart ら<sup>17)</sup>、Collste ら<sup>18)</sup>、Renton<sup>19)</sup>、Nocks<sup>13)</sup>の症例と本邦報告例では寛ら<sup>20)</sup>、豊田ら<sup>8)</sup>の症例である。

染色体分析：Parks<sup>21)</sup>は4歳の症例で buccal smears では chromatin 陰性で血液培養では正常であったと述べている。われわれの症例では46XYの正常型であった。それ以外には染色体分析の記載はないようである。

治療：重複側の睾丸が小さければ小さい方の除睾丸を施行している場合が多いが、生検のみで陰嚢内へ返納している場合も多い。

## 結 語

32歳の多睾丸症の1例を報告し、若干の文献的考察を加えた。

稿を終えるにあたり、病理組織学的診断につき御教示を賜った永岡貞男博士に深謝いたします。本論文の要旨は1981年1月22日開催された第399回日本泌尿器科学会東京地方会において発表した。

## 文 献

- 1) 白井将文：陰嚢内容が3個以上触知する疾患。症状よりみた男子性器疾患のすべて。1版，p.87～88，新興医学出版社，東京，1977
- 2) Golji H: Polyorchism: a case report. J Urol 74: 207～210, 1955
- 3) Ahlfeld F: Die Missbildungen des Menschen. Leipzig, Grunow, 1880
- 4) Lane A: A case of supernumerary testis. Tr Clin Soc London 28: 59, 1895
- 5) Mariotti B: Un Raro Caso Di Triorchismo. Gass d osp 28: 1070, 1907
- 6) Jeannin and Delater: Testicules Surnumeraires a Propos D'une Observation de Troisieme Testicule Histologiquement en Activite. Bull & Mem de la Soc Anat 93: 677, 1923
- 7) Edington GH, Blacklock JWS: A case of duplication or subdivision of the testicle. Brit med J 1: 937～939, 1928
- 8) 豊田 泰・丸山邦夫：多睾丸症について。日泌尿会誌 65: 181～188, 1974
- 9) 安井平造・瀧原博史：多睾丸症の1例。臨泌 30: 435～438, 1976
- 10) 藤岡良彰・石井洋二・中神義三・陳 淳水・川井博：血管腫および奇形腫を伴った多睾丸症の1例。日泌尿会誌 69: 509～510, 1978
- 11) 三橋裕行・高松恒夫・波治武美・高村孝夫：多睾丸症の1例。日泌尿会誌 71: 972, 1980
- 12) Wilson WA, Littler J: Polyorchism: report of two cases with torsion. Brit J Surg 41: 302～307, 1953
- 13) Nocks BN: Polyorchism with normal spermatogenesis and equal sized testes: a theory of embryological development. J Urol 120: 638～640, 1978
- 14) Goldstein HH, Casilli AR: Rhabdomyosarcoma of the cremasteric muscle and concomitant polyorchism. J Urol 41: 583～591, 1939
- 15) Wescott JW, Dykhuizen RF: Polyorchism. J Urol 98: 497～500, 1967
- 16) Corwin SH, Addonizio J, Nagamatsu GR: Polyorchism with anomalous urogenital union. J Urol 104: 346～349, 1970
- 17) Smart RH: Polyorchism with normal spermatogenesis. J Urol 107: 278, 1972
- 18) Collste LG, Garrets B: Polyorchism. Scand J Urol Nephrol 8: 167～168, 1974
- 19) Renton CTC: A case of polyorchidism with inter sex. J Urol 113: 720～724, 1975
- 20) 寛 英雄・小林 収・津村芳雄：多睾丸症の1例。日泌尿会誌 63: 991, 1972
- 21) Parks TG: Chromosome studies in polyorchism. Brit J Surg 54: 113～114, 1967

(1981年4月9日受付)